

대장암 수술 후 추적 대장내시경검사에서 발견된 무증상 장관 포상 기종 1예

연세대학교 의과대학 내과학교실 및 소화기병 연구소, *병리학교실

박인혜 · 조재희 · 최창환 · 이상길 · 김태일 · 김호근* · 김원호

A Case of Pneumatosis Cystoides Intestinalis

In Hae Park, M.D., Jae Hee Cho, M.D., Chang Hwan Choi, M.D., Sang Kil Lee, M.D.,
Tae Il Kim, M.D., Ho Guen Kim, M.D.* and Won Ho Kim, M.D.

Departments of Internal Medicine, Institute of Gastroenterology and *Pathology,
Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

장관 포상 기종은 장관의 점막하 또는 장막하에 공기로 찬 낭조직이 다발성으로 형성되는 드문 질환으로 성인에게 발생한 경우에는 대부분 독립적으로 나타나기보다는 다른 위장관 질환이나 폐쇄성 폐질환 등과 동반되어 우연히 발견된다. 영아에서 발생한 장관 포상 기종은 대부분 괴사성 장염과 동반되며 사망률이 높고 예후가 불량하나 성인의 경우는 보통 양호한 임상경과와 예후를 보인다. 원인이나 병태생리학적인 기전은 아직 명확하게 규명되어 있지 않으나 대개 물리적 요인과 세균적 요인으로 설명하고 있으며, 내시경 하 조직검사와 방사선학적 검사를 통해 진단하게 된다. 무증상인 경우 동반된 질환에 대한 치료만 하면 되나 장중첩증, 장염진, 장폐쇄증 등 합병증이 발생한 경우 수술 치료가 필요하다. 저자 등은 대장암으로 수술 받은 후에 전신항암치료를 마치고 외래 추적 대장내시경 시술을 받은 환자에서 장관 포상 기종이 발견된 1예를 경험하여 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

색인단어: 장관 포상 기종, 대장 내시경, 항암치료, 대장절제술

서 론

장관 포상 기종은 장관벽 점막하에 공기로 찬 낭종이 형성되는 드문 질환으로 문헌에 의하면 1783년 Du Vernoi에 의해 처음으로 기술되었다.¹ 소아에서는 주로 괴사성 장염과 연관되어 발견되며 사망률이 매우 높고 예후가 불량하나² 성인의 경우에는 양호한 임상경과와 예후를 보이며 다양한 위장관 질환이나 호흡기 질환, 교원-혈관질환과 동반되어 나타나고 대부분 증상이 없어 우연히 검사에서 발견되는 경우가 많다.^{3,5} 그 외

골수, 신장, 간, 심장, 폐 이식 후 발생한 사례들이 보고되고 있다.⁴ 저자 등은 대장암으로 대장절제술을 시행받고 전신항암치료를 받은 후 별다른 증상 없이 외래 추적 중인 환자의 대장내시경검사에서 우연히 발견된 무증상 장관 포상 기종 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고한다.

증 례

51세 남자환자는 2001년 1월 횡행결장암으로 우반결장절제술을 시행받고 Modified Duke stage B2 로 진단된 후 2001년 4월까지 3차례 5-fluorouracil 750 mg, leucovorin 30 mg 정맥 내 전신 항암 화학 요법을 받았으며 이후 항암치료를 거부한 상태에서 외래 추적 관찰하던 중 2003년 2월 시행한 추적 대장내시경검사에서 다발성 대장용종이 발견되어 진단적 용종절제술을

접수 : 2004년 12월 7일, 승인 : 2005년 5월 19일

연락처 : 김원호, 서울시 서대문구 신촌동 134

우편번호: 120-752, 연세대학교 의과대학 내과학교실

Tel: 02-2228-1930, Fax: 02-393-6884

E-mail: kimwonho@yumc.yonsei.ac.kr

시행하였다.

환자는 과거력에서 당뇨병, 폐결핵, 고혈압은 없었으며 가족력에서도 특이소견이 없었다. 문진 시 오심, 구토, 변비, 설사, 체중 감소는 없었다. 혈압은 140/90 mmHg, 맥박수는 분당 80회, 호흡수는 분당 20회, 체온은 36.5°C, 키 168 cm, 몸무게 56 kg이었다. 전신상태는 비교적 양호하였고, 두경부나 사지에 촉진되는 림프절 비대는 없었으며, 흉부 진찰 시 이상소견은 없었다. 복부는 편평하고 부드러우며, 간이나 비장은 촉진되지 않았으며, 압통과 만저지는 종괴는 없었다. 일반혈액검사에서 백혈구 6,100/mm³ (호중구 56.8%, 림프구 34.1%, 단핵구 5.4%, 호산구 3.2%, 호염구 0.5%), 혈색소 15.1 g/dL, 혈소판 203,000/mm³이었다. 혈청생화학검사에서는 총단백이 6.7 g/dL, 알부민 4.7 g/dL, AST 26 IU/L,

ALT 30 IU/L, 총빌리루빈이 1.5 mg/dL이었으며 CEA는 1.5 ng/mL이었다.

환자는 2001년 11월 항암치료 후 추적 복부 전산화 단층 촬영을 하였으며 이때 특이 소견이 발견되지 않았다. 2003년 2월 시행한 추적 복부전산화단층촬영에서도 우반 결장절제술 이후 상태로 재발이나 장관 내 병변은 관찰되지 않았으나(Fig. 1), 동시에 시행한 대장 내시경검사서 소장과 대장의 문합부위부터 횡행결장까지 전형적인 선종성 용종과는 달리 주위 정상 점막과 같은 점막으로 덮인 3~10 mm 크기의 용종성 병변이 다수 관찰되었다. 병변의 끝에는 붉은 색의 미란이 관찰되었으며 진단적 용종절제술을 시행하였을 때 공기나 체액의 누출은 없었다(Fig. 2). 조직병리검사 소견

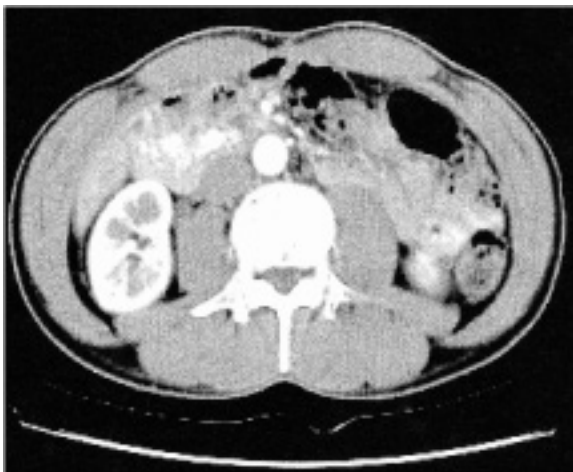


Figure 1. Abdominopelvic CT. It shows no grossly visible colonic or extracolonic lesions.

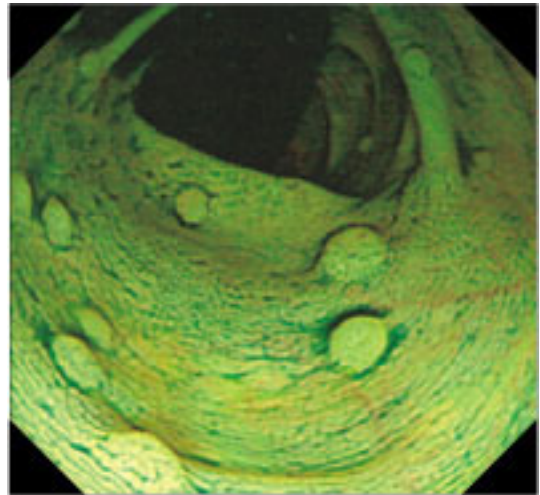


Figure 2. Colonoscopic finding. The lesions prominent after chromography with indigocarmine. There are noted multiple variable sized, polypoid lesions on the transverse colon.

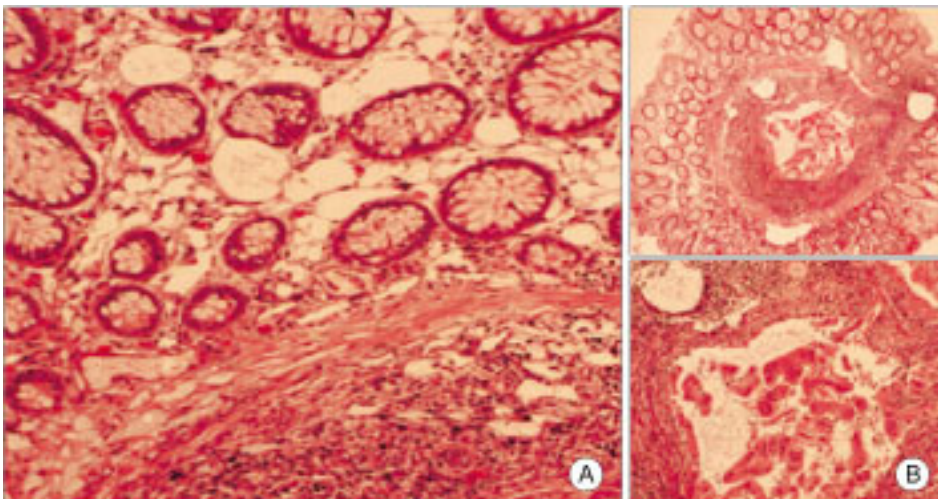


Figure 3. Microscopic findings. (A) The lamina propria and submucosa of specimen contain several small air-filled spaces (H&E stain, ×100). (B) There is submucosal cystic granuloma lined by multinucleated giant cells and epithelioid cells (H&E stain, ×40).

에서 대장 점막 하 부위에 기포와 상피양세포 및 다핵성 거대세포로 이루어진 육아종이 관찰되어 장관 포상 기종으로 진단되었으며(Fig. 3), 환자는 별다른 임상 증상이 없어 현재 외래 추적 관찰 중이다.

고 찰

장관 포상 기종은 장벽의 점막하층이나 장막하층에 선형 또는 낭종 형태의 공기가 차 있는 것으로 독립적인 질병이라기보다는 다른 질병과 연관되어 나타나는 하나의 증후로서 이해해야 한다. 대체로 성인에서는 폐쇄성 호흡기 질환, 이식을 포함한 위장관 수술 후, 허혈성 장염, 약제, 특히 스테로이드, 항암제, 면역억제제 사용 후 또는 내시경적 조직검사 후에 발견된 사례가 보고되고 있다. 포상기종은 호발연령이 40~50대이며 남녀의 비는 문헌마다 약간씩 다르게 보고되고 있지만 여자보다 남자에서 약 2~3배 더 잘 발생하는 것으로 알려져 있다.¹

포상기종으로 인한 임상증상은 부분적인 장관폐쇄, 장염전, 장충첩증, 외인성 압박 등에 의한 비특이적인 복통, 변비, 혈변 등이며 본 증례와 같이 무증상으로 우연히 발견되는 경우도 많다.^{1,5} 대체로 다른 질병에 이차적으로 동반되기 때문에 특별히 구별되는 증상이 없으며 또 증상만으로 진단할 수도 없다.⁶

장관 포상 기종의 원인은 대개 두 가지 가설로 설명된다. 첫째는 물리적인 기전에 의한 것으로 장관 내 혹은 폐에서 나온 공기가 손상된 장관벽을 통해 점막하층으로 들어가서 염증반응을 일으키고 낭종을 형성한다는 것이다.⁷ 이것은 소화관 궤양, 장관폐쇄, 대장내시경 등과 같은 검사 후 생기는 포상기종이나 만성폐쇄성폐질환, 천식, 폐섬유화증, 폐포확장증과 동반된 경우를 설명하는 데 유용하다. 폐질환이 있을 경우 기침에 의해 폐포 파열이 일어날 수 있으며 이때 미세한 공기들이 혈류를 타고 중격동으로 모여 큰 혈관을 따라 후복막강으로 이동한 후 혈관주위의 공간을 따라 장관 점막하에 침투하게 된다. 이것은 중격동 내로 공기를 주입한 후 포상기종이 생기는 실험을 통해 확인할 수 있으며, 수술이나 대장내시경검사 후 발생하는 포상기종도 이 가설에 의해 설명할 수 있다. 즉 대장내시경의 전처치인 하제 사용시이나 내시경검사 시 공기를 주입하면 장내압이 증가하고 손상된 장벽 사이로 공기가 침윤해 염증반응을 일으키게 된다.

둘째로는 세균성 감염에 의한 것이다.⁸ 이것은 가스를 생성하는 균을 무균의 쥐에 접종하여 포상기종이

생긴 것을 보인 Yale⁸의 실험에 의해 제기되었으나 포상기종을 배양했을 때 무균상태로 확인되며 이런 포상기종이 터졌을 때 세균성 복막염이 생기지 않는 등의 한계가 있다.² 따라서 어느 한 가지 기전만이 아니라 위 두 가지 기전이 서로 상호 작용함으로써 포상기종이 생기는 것으로 추측되고 있다. 본 증례의 경우 우반결장절제술을 시행받은 무증상의 환자로 수술 당시 장관 포상 기종은 없었으며, 수술 후 3개월 동안 3차례의 항암치료를 받았고, 수술 후 9개월째 시행한 추적 복부 전산화 단층촬영에서 이상 소견이 없었으나 25개월 뒤에 시행한 추적 대장내시경검사에서 다발성 용종 형태의 대장포상기종이 발생하였다. 환자는 수술을 받고 항암제 이외의 다른 약제의 복용 병력이 없어 수술과 같은 물리적인 이유와 항암제에 의한 장관 포상 기종 발생 가능성을 유추해 볼 수 있다. 항암제 투여 후 장관 포상 기종이 발생한 경우는 paclitaxel, docetaxel, taxol 같은 심한 면역력 저하를 동반하는 약제들에서 발생된 것으로 보고되고 있어^{11,12} 본 환자와 같이 5-FU 전신 항암 화학 요법을 받고 면역력 저하가 없었던 경우는 발생 가능성이 떨어진다. 따라서 이 환자의 경우는 수술과 같은 물리적 요인에 의해 포상 기종이 발생한 것으로 생각해 볼 수 있다.

장관 포상 기종을 진단하기 위해서는 방사선학적, 내시경적 소견 및 조직검사가 필요하다. 일반 복부단층촬영에서는 장의 윤곽선을 따라 기체로 차 있는 저음영이 관찰되기도 하며 장간막 사이사이로 공기음영이 보이기도 한다. 기종의 크기가 1 cm 이상일 경우는 전산화단층촬영에서도 보일 수 있으나 본 증례와 같이 크기가 작은 경우는 확인하기가 어렵다. 대장바륨조영술에서는 공기음영이 장관강에 인접해서 장관의 윤곽선을 따라 관찰된다. 대장내시경검사 소견은 장관 강내로 돌출된 용종성 병변이 다수 관찰되며 이 병변을 천자하거나 장관 내로 공기를 주입하면 용종의 모양, 크기가 변하며 공기가 빠져나가 쭉그러드는 것을 관찰할 수 있다. 조직검사 소견은 점막하에 공기가 모여있는 형태와 주변세포와의 관계에 따라 소포성, 낭종성, 확산성 등으로 나눌 수 있다.^{7,13} 소포성 병변은 점막 고유층에 10~100 μ m 크기의 낭으로 발견되며 조직구로 이루어진 내피를 보기가 어렵다. 대개 대장내시경검사 후에는 소포성의 대장 포상 기종이 발견되는 경우가 많다. 낭종성 병변인 경우는 병변이 주로 점막하나 장막하층에 위치하며 정방형의 백혈구가 낭을 둘러싸 낭벽을 이루고 있고 다핵거대세포들이 있는 육아종이 있거나 호산구, 림프구, 형질세포와 같은 다수의 염증세포

들이 관찰된다. 확산성 병변은 주로 장염, 허혈성 장염, 염증성 장염 등에서 발견되며 장벽에 스폰지 모양의 병변이 광범위하게 관찰된다.¹³ 본 증례의 경우 복부전산화단층촬영에서 장관벽 내 공기 음영은 관찰되지 않았고, 내시경 소견상 용종이 관찰되었으나 천자 시 공기가 빠져나가거나, 줄어드는 것은 관찰되지 않아 방사선학적 소견 및 내시경 소견만으로는 대장 포상 기종 진단이 어려웠다. 그러나 조직검사 소견에서 대장 점막하 부위에 기포와 상피양세포 및 다핵성 거대세포가 구성하는 전형적인 육아종 및 낭종이 관찰되어 대장 포상 기종을 진단할 수 있었다.

일차성 포상 기종의 치료는 위에서 언급한 병태생리학적 가설에 기반하여 이루어진다. 첫째 산소요법이 있으며 이것은 마스크나 비강 케눌라를 이용하여 60~70% 산소로 혈중산소분압이 250~300 mmHg가 유지되도록 하여 4~10일간 흡입하거나 2.5기압의 고압산소 치료를 2~3일 동안 시행한다.⁹ 이는 포상기종 내에 있는 고농도의 수소가 농도차에 의해 장관 내로 확산되어 나오는 것을 이용한 것이다. 두번째는 주로 가스를 형성하는 혐기성 세균에 대한 항생제 요법을 고려한다.¹⁰ 이 외에도 식이요법, 내시경적 경화술 및 수술 치료법이 있으며 이차성, 즉 다른 질병과 동반되어 나타나는 경우에는 원인질환에 대한 치료가 동반되어야 한다. 본 증례의 경우는 무증상 환자로 별다른 치료 없이 외래 추적 관찰 중이다.

최근 대장내시경의 빈도가 늘고 있으며 이로 인해 포상기종의 진단율도 증가할 가능성이 있다. 이 경우 선종성 용종, 림프종, 림프계 과형성과 같은 다른 질환과의 감별이 필요하며, 불필요한 조작, 검사, 시술을 하지 않도록 유의하여야 한다. 저자 등은 무증상의 환자에서 우연히 발견된 장관 포상 기종 1예를 경험하여 보고하는 바이다.

ABSTRACT

Pneumatosis cystoides intestinalis (PCI) is a rare condition defined as the presence of multiple gas-filled cysts in the wall of gastrointestinal tract. The etiology and pathogenesis of PCI remain uncertain. It is associated with various medicosurgical conditions, including various pulmonary and gastrointestinal diseases, connective tissue diseases and endoscopic procedures. The diagnosis is confirmed by endoscopic puncture and biopsy. PCI in adults, for the most part, show a benign clinical course and better prognosis if

the associated disease is well controlled. Infantile PCI is more serious condition and especially associated with necrotizing enteritis. The treatment is usually conservative, However surgical intervention is needed when complications such as intussusception, obstruction, bleeding and perforation develop. We experienced a case of PCI found during the follow-up colonoscopy in a patient taken right hemicolectomy and systemic adjuvant chemotherapy due to colon cancer. (*Korean J Gastrointest Endosc* 2005;30:336-339)

Key Words: Pneumatosis cystoides intestinalis, Colonoscopy, Chemotherapy, Hemicolectomy

참 고 문 헌

1. Koss LG. Abdominal gas cyst (pneumatosis cystoides intestinalis): an analysis with a report of a case and a critical review of the literature. *AMA Arch Pathol* 1952;53: 523-549.
2. 정성애, 양석균, 정훈용 등. 장관 포상기종 1예. *대한소화기내시경학회지* 1997;18:611-617.
3. Smith WG, Anderson M Jr, Pemberton HW. Pneumatosis cystoides intestinalis involving left portion of colon; report of four cases diagnosed at sigmoidoscopy. *Gastroenterology* 1958; 35:528-533.
4. 이천균, 송시영, 이용찬 등. 심장이식 후 발생한 대장기종 1예. *대한소화기학회지* 1997;28:732-737.
5. 유혜영, 채현석, 김철혜 등. 비특이적 증상의 장관 포상 기종 1예. *대한소화기내시경학회지* 2001;23:251-254.
6. Yao H. Pneumatosis intestinalis: a review. *Am J Gastroenterol* 1995;90:1747-1756.
7. Nelson SW. Extraluminal gas collections due to disease of gastrointestinal tract. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med* 1972;115:225-248.
8. Yale CE, Balish E. Pneumatosis cystoides intestinalis. *Dis Colon Rectum* 1976;19:107-111.
9. Holt S, Gilmour HM, Buist TA, Marwick K, Heading RC. High flow oxygen therapy for pneumatosis coli. *Gut* 1979;20: 493-498.
10. Jauhonen P, Lehtola J, Karttunen T. Treatment of pneumatosis coli with metronidazole. Endoscopic follow-up of one case. *Dis Colon Rectum* 1987;30:800-801.
11. Candelaria M, Boursion-Cuellar R, Zubieta JL, et al. Gastrointestinal pneumatosis after docetaxel chemotherapy. *J Clin Gastroenterol* 2002;34:444-445.
12. Galm O, Fabry U, Adam G, Osieka R. Pneumatosis intestinalis following cytotoxic or immunosuppressive treatment. *Digestion* 2001;64:128-132.
14. 채승완, 안혜경, 손진희. 성인의 회장에 발생한 창자벽공기낭종 1예 보고-. *대한병리학회지* 2002;36:119-121.